

기관지확장증과 동반된 식도기관지루 1례

아주대학교 의과대학 호흡기내과, 흉부외과학교실*, 해부병리학교실**

정혁준, 구성현, 이선민, 박광주, 황성철,
이이형, 한명호, 김영진*, 이철주*, 이기범**

= Abstract =

A Case of Broncho-esophageal Fistula Associated with Bronchiectasis

Hyuck Joon Chung, M.D., Sung Hyun Ku, M.D., Sun Min Lee, M.D.,
Kwang Joo Park, M.D., Sung Chul Hwang, M.D., Yi Hyeong Lee, M.D.,
Myung Ho Han, M.D., Yung Jin Kim, M.D.*, Chul Ju Lee, M.D.*, Ki Bum Lee, M.D.**

Department of Pulmonology, Thoracic Surgery, and Pathology**,
Ajou University, College of Medicine, Suwon, Korea*

Broncho-esophageal fistula (BEF) is an uncommon clinical entity which can cause severe suppurative lung disease. Acquired fistulas between the esophagus and tracheobronchial tree are relatively uncommon. They are caused by many diseases including malignancy and chronic inflammation such as tuberculosis and have favorable outcome with proper treatment. To our knowledge, there has been no description of patients with BEF due to the bronchiectasis.

We report a case of broncho-esophageal fistula in association with bronchiectasis in a 35-year-old male patient with hemoptysis. Bronchoscopy revealed mild bleeding from the superior segment of the right lower lobe without specific endobronchial lesion. Barium esophagogram could not confirm the fistula. The diagnosis of a broncho-esophageal fistula was established by an esophagogastrosocopy using fistulogram and subsequent bronchoscopy, in which the communication between the bronchial tree and the esophagus was demonstrated by instilling dye selectively through the fistulous opening using esophagogastrosocopy and visualizing the fistula and the bronchial tree. The patient was treated with resection of the right lower lobe, extirpation of the diverticulum and surgical closure of the bronchial defect and fistula, but he suffered from pneumonia thereafter and eventually expired due to sepsis and multiple organ failure. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 1999, 46 : 729-734)

Key words : Broncho-esophageal fistula, Bronchiectasis, Hemoptysis.

서 론

식도기관지루(broncho-esophageal fistula)는 비정상적인 기관지와 식도의 교통에 의해 반복적인 호흡기 증상과 합병증을 초래하는 질환으로 원인에 따라 선천성 및 후천성으로 구분된다. 성인에서 식도기관지루는 대부분이 후천성으로 그 중 악성종양이 가장 흔한 원인이다¹⁾. 악성종양 중에서는 식도암이 75%로 가장 흔하며, 그외 폐암, 종격동 종양, 후두암 등이 원인이 될 수 있다. 양성 원인 질환으로는 만성적인 염증을 일으키는 질환이 원인이 될 수 있는데 결핵, 진균증 및 매독과 같은 만성염성 질환이나 외상, 기도 이물 등이 주요한 원인으로 알려져 있다.

국내에서도 식도암이나 결핵이 가장 흔한 원인으로 알려져 있고, 그 후 원인으로서는 식도 개실과 동반된 경우 등의 증례 보고가 있었으나^{2,3)} 기관지확장증과 동반된 예는 보고된 바가 없었다.

저자들은 객혈을 주소로 내원한 기관지확장증 환자에서 기관지경, 식도내시경 및 식도조영술로 식도기관지루를 확인하고 수술적 치료를 시행한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 조○필, 남자 35세

주 소 : 300ml 가량의 객혈

현병력 : 환자는 내원 5개월전에 객혈을 주소로 본원에 입원하여 기관지확장증 진단하에 보존적 치료를 받은 후 호전되어 퇴원하였던 분으로 내원당일 상기증상으로 응급실을 통해 본원 내과에 입원하였다.

과거력 : 내원 8년전부터 정신분열증으로 개인병원에서 입원 및 외래 치료를 받아왔으며, 7년전 폐결핵의 증으로 10개월간 약물치료를 받은 바 있다.

가족력 : 특이사항 없음.

이학적 소견 : 내원당시 혈압은 120/80 mmHg, 맥박수 90회/분, 호흡수 22회/분, 체온 37.6°C이었고 의식은 명료하였다. 흉부 청진상 우폐 하야에서 습성

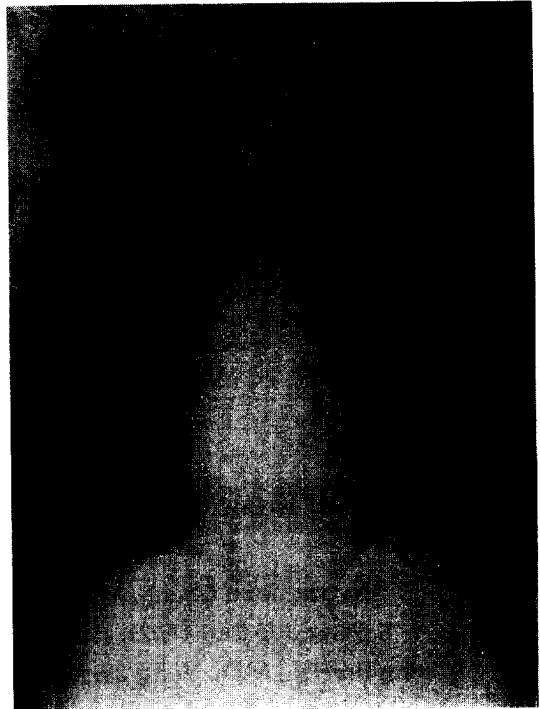


Fig. 1. Chest PA. This shows dense consolidation with volume loss on the right lower lung zone.

수포음이 청진되었다. 복부 및 사지 진찰에서 특이소견은 없었다.

검사실 소견 : 내원시 말초혈액 검사상 백혈구수 8,600/mm³, 혈색소 8.8g/dl, 혈소판 127,000/mm³이었다. 객담 항산성균 도말검사, 객담 배양 검사, 세균 배양검사상 음성이었다. 폐기능 검사상 노력성 폐활량(FVC) 4.04L(예측치의 88%), 1초간 노력성 호기량(FEV₁) 3.95L(예측치의 103%), FEV₁/FVC 98%이었다.

방사선 소견 : 입원당시 흉부 X-선상, 우폐 하야에 경화 및 용적감소의 소견이 관찰되었고(Fig. 1), 흉부 전산화단층촬영상 우하엽 상분절에 낭성 기관지 확장증의 소견(Fig. 2A) 및 주변에 혈관 증식 및 비대가 관찰되었고, 이 부위와 식도 사이에 교통이 의심되는 소견이 관찰되었다(Fig. 2B).

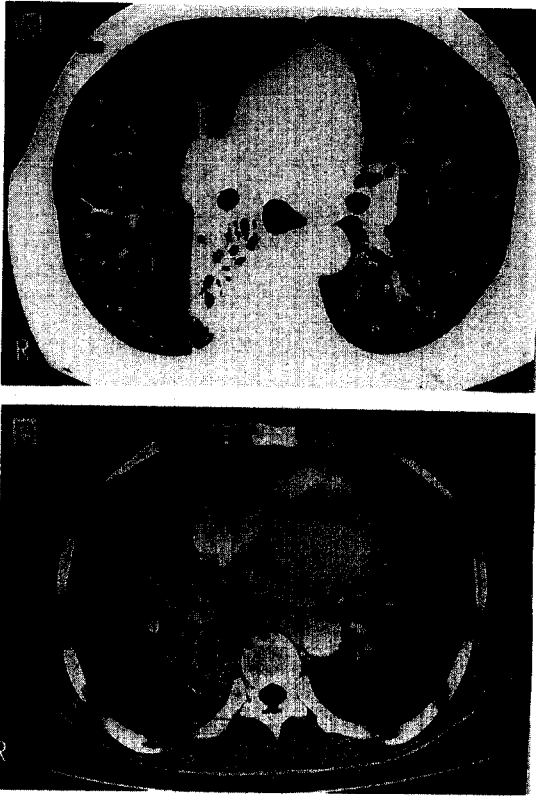


Fig. 2. A. Cystic bronchiectasis was found on the superior segment of the right lower lobe.
B. connecting tract was noted between the bronchiectatic segment and the esophagus suggesting broncho-esophageal fistula (arrow).

기관지경 소견 : 우하엽 상분절 기관지에서 출혈의 소견이 관찰되었다 (Fig. 3).

식도 내시경 소견 : 절치에서 26cm 부위에 식도계실이 발견되었으나 계실 부위에는 누관이 관찰되지 않았다. 절치에서 34cm 및 36cm 부위의 식도 중부에 출혈을 동반한 2개의 누공이 발견되었다 (Fig. 4).

식도조영술상 기관분기부 6cm 아래 부위의 식도 중부에 누관이 의심되는 소견이 있어 식도내시경을 통하여 누공 부위에 선택적 조영술 (fistulography) 을 시행한 결과 식도기관지루를 확진하였다 (Fig. 5).

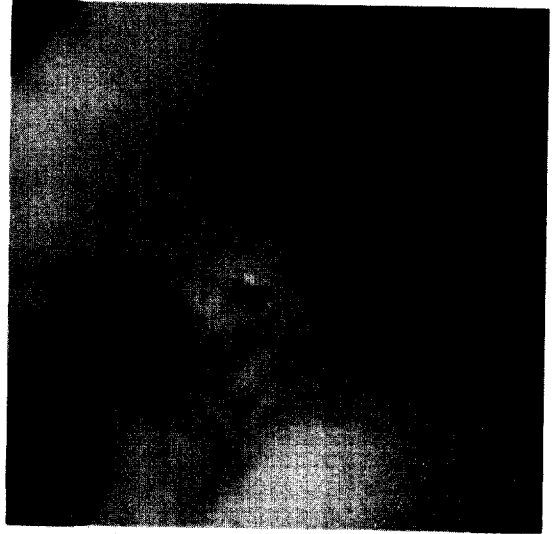


Fig. 3. Bronchoscopic finding. This shows mucosal inflammatory swelling of the superior segmental bronchus of RLL with easy bleeding.

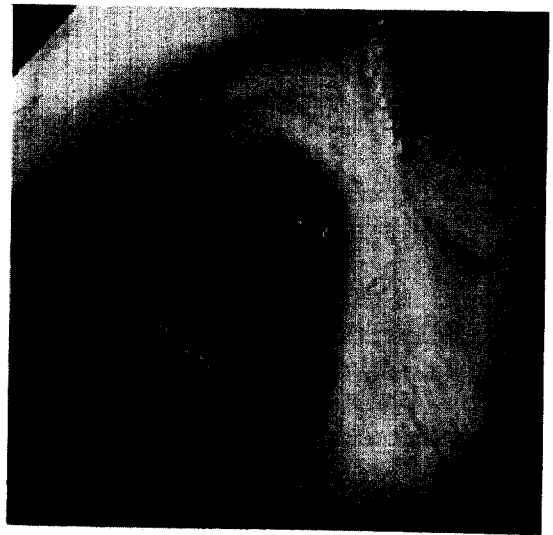


Fig. 4. Esophagogastroscopy showed the opening of the fistula on the mid-esophagus (the upper one: 34cm from the incisor; the lower one: 36cm from incisor.)



Fig. 5. Fistulography through the esophagogastroscopy showed the broncho-esophageal fistula.

병리소견 : 기관지확장증과 혈관 파열 및 기관지 및 폐포강내에 출혈 소견이 관찰되었다(Fig. 6).

경과 및 치료 : 환자는 수술적 치료를 시행하였는데 비대한 혈관에서 출혈이 심하여 결국 우측 전폐 절제술을 시행하였고, 식도개실 절제술 및 식도기관지루 제거술을 같이 시행하였다. 이후 환자는 보존적 치료를

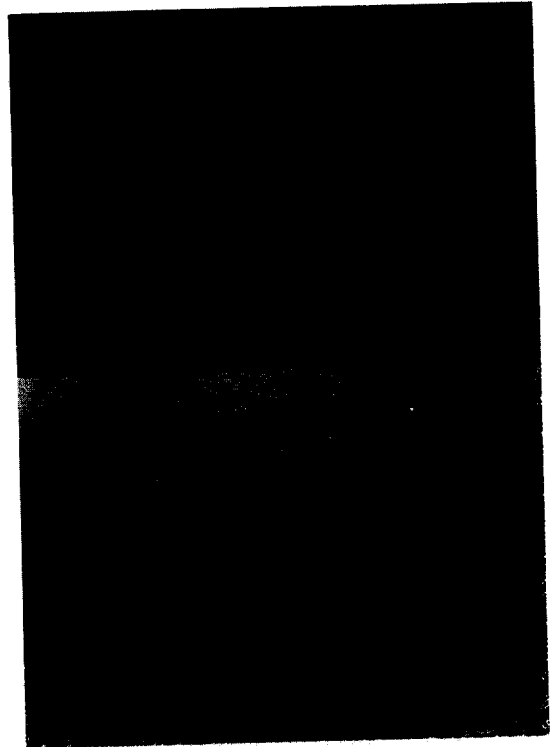


Fig. 6. Pathologic finding. Diffuse fibrous and regenerative change of bronchiolar epithelium and pulmonary vessel rupture into the bronchial lumen and thrombi formation without evidence of tuberculosis or malignancy. (H&E stain, $\times 100$)

시행하던 중에 폐렴과 패혈증이 병발하여 입원 70일째에 사망하였다.

고 찰

식도기관지루는 비정상적인 기관지와 식도의 교통에 의해 반복적인 호흡기 증상과 합병증을 초래하는 질환으로 그 발생원인에 따라 선천성 및 후천성으로 구분된다. 선천성인 경우는 대개 식도폐쇄를 동반하므로 신생아기에 심한 증상으로 발현되며 조기에 수술로서 교정해야 하는데, 식도폐쇄를 동반하지 않는 경우는 증상이 서서히 발현되어 성인에 이르러서야 발견되는

경우도 있다^{4,5)}. 일반적으로 성인에서 발견되는 식도 기관지루의 원인질환으로는 악성 종양이 가장 흔하며 그 빈도는 약 46-82% 정도로 보고되고 있다¹⁾. Monserrat 등⁶⁾은 670예의 식도기관지루 환자를 분석한 결과, 367예(55%)가 종양이었고, 222예가 선천성, 40예가 외상성, 41예가 염증성이었고, 염증성 중 3예가 결핵성이었다고 보고하였다. 악성종양 중에서는 식도암이 75%로 가장 흔하며 그외 폐암, 종격동암, 후두암 등이 있다.

양성 원인질환으로는 결핵, 진균증 및 매독과 같은 감염성질환이나 외상 등이 주요한 원인이 되고, 식도 게실과 동반되는 경우도 있다⁷⁾. 이중 결핵이 가장 흔한 감염성질환으로 알려지고 있다. Coleman 등⁸⁾은 성인에 있어서 후천성 비악성식도기관지루의 원인중 10-19%를 결핵이 차지하는 것으로 보고한 바 있으며 Wychulis 등⁹⁾은 36예중 5예(14%)가 결핵성이었다고 보고하였다. 국내에서도 결핵에 의한 식도기관지루는 수차례의 보고가 있었다. 결핵에서 식도기관지루가 발생하는 기전은 기관지나 림프절에 있는 결핵성 염증이 식도로 파급되거나 결핵성 농양의 천공 등이 원인이 되며, 또한 주위 림프절들이 만성 염증으로 인하여 식도와 유착하여 게실을 형성한후, 게실의 천공으로 누관을 형성하기도 한다고 설명하고 있다^{10,11)}. 이와 같은 만성 염증성 질환에 있어서 괴사성 염종의 파급으로 인하여 누관이 형성되는 것으로 설명되고 있으며 결핵 이외에도 진균감염증, Herpes 식도염¹²⁾, 식도 게실, 폐격리증¹³⁾ 등과 동반된 식도기관지루에 있어서도 비슷한 발생 기전으로 설명되고 있다.

본 예는 기관지확장증에 의해서 식도기관지루가 합병된 것으로 사료되는데, 발생 부위가 우하엽 상분절로서 결핵의 가능성도 고려해야 하지만 객담 및 기관지 세척액의 항산균 도말 및 배양 검사에서 결핵균이 동정되지 않았고, 수술로 절제된 병변부위의 폐조직검사에서 육아종성 병변 등 결핵을 의심할 만한 소견은 전혀 보이지 않은 점 등으로 결핵의 가능성은 배제할 수 있는 것으로 사료된다. 기관지확장증은 만성적인 감염, 출혈, 폐기능장애 등이 잘 나타나지만 식도기관

지루가 병발하는 경우는 매우 드물고 그 발생기전 또한 특별히 알려져 있지 않다. 본 증례에 있어서는 식도와 인접한 부위에 심한 기관지확장증이 있었기 때문에 이 부위의 만성적인 염증으로 인하여 조직괴사가 일어나고 이러한 염증 및 괴사가 진행하고 파급되어 전술한 결핵성 식도기관지루와 비슷한 기전에 의해서 누관이 형성된 것으로 추론할 수 있을 것이다.

식도기관지루의 증상으로는 가장 흔한 것은 만성적으로 재발하는 호흡기 감염증의 양상이다. 만성적 기침, 반복적 폐렴, 폐농양 등의 소견 이외에 연하곤란, 연하통, 토혈, 복부팽만 같은 위장관 증상이 나타나기도 한다. 식도기관지루 207예의 보고에서 증상을 보면 기침 및 흡인이 가장 많았으며, 그의 발열, 연하장애, 폐렴, 객혈, 흉통 등이 있었고 무증상인 경우도 21예가 있었다^{14,15)}.

식도는 해부학적으로 기도의 좌측으로 비스듬히 이행하여 기관분기부에서는 좌측기관지 후면에 위치하고 있는데 누관의 위치에 있어서는 악성종양에 의한 식도기관지루는 주로 좌측기관지와 통하는데 비하여 비악성원인질환에서는 우측기관지와 연결되는 경우가 많다고 한다. 식도 게실에 있어서 식도기관지루가 병발한 보고가 다수 있으며³⁾, 그 외 종격동, 흉강, 대혈관 등으로의 누관 형성도 보고된 바 있다. 식도게실에 의한 누관 역시 좌측보다 우측이 2배정도 더 호발하며 기관이나 주기관지보다 2차 및 3차 기관지에 호발한다고 알려져 있는데⁸⁾ 본 예에서는 우측기관지와 식도와의 연결이 있었고 식도게실이 발견되었으나 게실과 기관지와의 교통은 없었으며, 이 게실과는 다른 부위에 별개의 누관이 2개가 관찰되었고 이 누관과 기관지확장증 부위와의 교통이 확인된 바 있다.

식도기관지루의 진단방법으로는 식도조영술, 내시경검사, 기관지조영술 등이 이용되며, 흉부 전산화단층촬영으로 종격동의 림프절 종대, 악성종양유무를 알아볼 수 있으며, 누관이 발견되기도 한다. 식도기관지루의 치료는 항결핵제 발달로 결핵성 식도기관지루의 치료에 내과적인 치료가 좋은 결과를 보이고 있으나¹⁶⁾, 대개의 경우에는 수술적 치료가 필요하다¹⁷⁾. 누관 및

동반된 게실을 절제하고 식도재건술을 시행하거나, 폐 및 기관지의 손상이 심한 경우에는 부분적 폐절제술을 시행하여 좋은 결과를 얻을수 있다고 한다.

본 증례에서는 수술시에 비대 및 증식한 기관지동맥에서 대량 출혈이 나타나 어려움을 겪었고 수술이 광범위해졌으며, 이후 감염이 병발하여 결국 사망한 바 있는데 기관지 확장증과 동반된 식도기관지루의 수술에 있어서는 출혈의 위험성을 염두에 두어야 할 것으로 사료된다.

요 약

저자들은 객혈을 주소로 내원한 35세의 남자 환자에서 기관지경, 식도내시경 및 식도조영술로 기관지확장증에 의한 식도기관지루를 진단하고, 수술적 치료를 시행한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Mellins RB : Acquired fistula between the esophagus and the respiratory tract. Report of a case, review of the literature and discussion of the pathogenesis. *N Engl J Med* 246 : 896, 1952
2. 문병탁, 김상형, 이동준 : 식도기관지루를 합병한 식도게실 1례보고. *대한흉부외 과학회지* 16(3) : 405, 1983
3. 이영석, 최명규, 한석원, 정인식, 선희식, 김부성, 양일권, 광문섭, 이홍균 : 중 부식도 게실을 동반한 비악성 식도기관지루 1예. *대한소화기 병학회지* 21(4) : 966, 1989
4. 김주현 : 성인에서 발견된 선천성 식도-기관지루 수술치험 5예보고. *대한흉부 외과학회지* 16 : 381, 1983
5. Bekoe S, Magovern GJ, Liebler GA, Park SB, Cushing WJ : Congenital broncho-esophageal fistula in the adult. *Chest* 66 : 201, 1974
6. Monserrat JL : Fistulas tuberculosas esofago-traqueo-bronquicas. *Rev. asso. Med. Argent* 55 : 438, 1948
7. Svane S : Esophagobronchial fistula through a midesophageal diverticulum associated with fatal pulmonary bleeding. *Scandinavian Cardiovascular J.* 31(4) : 243, 1997
8. Coleman FP : Acquired non-malignant esophago-respiratory fistula. *Am J Surg* 93 : 321, 1957
9. Wychulis AR, Ellis FH, Anderson HA : Acquired non-malignant esophago-tracheobronchial fistula : Report of 36 Cases. *JAMA* 196 : 103, 1966
10. 장영운, 박충기, 방익수, 장린, 민영길, 김윤화, 양문호 : 식도의 결핵성 병원에 대한 임상적 고찰. *대한소화기내시경학회잡지* 5 : 7, 1985
11. Coleman FP, Bunch GH : Acquired non-malignant esophagotracheo-bronchial fistula. *J Thorac Surg* 19 : 542, 1950
12. Remy DP, Kuzmowych TV, Rohatgi PK, Ortega LG : Herpetic bronchitis with a broncho-esophageal fistula. *Thorax* 50 : 906, 1995
13. Savic B, Birtel FJ, Tholen W : Lung sequestration : report of seven cases and review of 540 published cases. *Thorax* 34 : 96, 1979
14. Butt M : Management of malignant esophago-respiratory fistula. *Chest Surg Clin N Am* 6 : 765, 1996
15. 박종하, 문진훈, 김재현, 최호정, 이재수, 황순철, 이준상, 강종식, 최한용 : 내과적 치료로 호전된 결핵성 식도기관지루 1예 대한내과학회지 32(5) : 690, 1987
16. 임승균 : 성인 양성 식도기관지루 수술치험 1례. *대한흉부외과학회지* 23(3) : 542, 1990